

شکاف حنجره نوع ۲ در شیرخوار ۲۰ ماهه: گزارش یک مورد

شیلان محمدی^۱، سیده سوما ذکریایی^۱، ندا شیخ ذکریایی^۲

گزارش مورد

چکیده

مقدمه: شکاف حنجره، یک ناهنجاری مادرزادی است که در اثر ارتباط غیرعادی بین مری با نای و حنجره ایجاد می‌شود. این بیماری نادر بوده که می‌تواند یکی از علل اصلی مشکلات تنفسی و تغذیه‌ای در شیرخواران و کودکان باشد. روش درمان شکاف حنجره، بر اساس شرایط بیمار بالینی متفاوت و شامل درمان دارویی و درمان‌های ترمیمی جراحی است. در این مقاله یک مورد شکاف حنجره‌ی نوع ۲ در شیرخوار دختر ۲۰ ماهه گزارش می‌گردد.

گزارش مورد: شیرخوار دختر ۲۰ ماهه با شکایت از تنگی نفس و خس خس سینه به بیمارستان آورده شده است. شیرخوار، سابقه‌ی ۳ نوبت بستری در بیمارستان به دلیل مشکلات بلع، اتلاف وزن و خس خس ینه با تشخیص عفونت ریه دارد. بعد از انجام روش‌های تشخیصی تشخیص شکاف حنجره گردید ۲ داده و شیرخوار کاندید عمل جراحی و تراکستومی شد. بعد از جراحی، مصرف یک ماهه‌ی دارو و خروج تراکئوستومی، حال عمومی شیرخوار مناسب شد.

بحث: در شکاف حنجره، انجام عمل جراحی و تراکستومی جهت رفع مشکلات تنفسی بیمار ضرورت دارد.

واژگان کلیدی: شکاف حنجره؛ شیرخوار؛ سیستم Benjamin-Inglis

ارجاع: محمدی شیلان، ذکریایی سیده سوما، شیخ ذکریایی ندا. شکاف حنجره نوع ۲ در شیرخوار ۲۰ ماهه: گزارش یک مورد. مجله دانشکده پزشکی اصفهان ۱۴۰۳؛ ۴۲ (۷۸۸): ۹۳۶-۹۴۰.

مقدمه

شکاف حنجره (Laryngeal cleft, LC)، یک بیماری مادرزادی است که در آن، در اثر وجود یک سوراخ در دیواره‌ی خلفی حنجره، تراشه و به ندرت برونکوس با فارتکس و قسمت فوقانی مری، غذا و مایعات از مری خارج و وارد راه هوایی شده و باعث بروز آسپیراسیون می‌شود (۱). در ۱۶ تا ۸۸ درصد موارد، شکاف حنجره همراه با سایر ناهنجاری‌ها، به خصوص ناهنجاری در دستگاه گوارش و سیستم ادراری دیده می‌شود که می‌تواند مطرح کننده‌ی مسائل ژنتیکی باشد. چهار سندرم ژنتیکی که اغلب با شکاف حنجره مرتبط هستند شامل سندرم‌های Opitz-Friaz, Pallister-Hall, DiGeorge, CHARGE و VACTERL می‌باشند (۲). میزان بروز شکاف حنجره نادر است و حدود ۱ در هر ۱۰۰۰۰ تا ۱ در هر ۲۰۰۰۰ مورد گزارش شده است و میزان بروز آن در شیرخواران پسر بیشتر می‌باشد (۳). علائم بالینی شکاف حنجره متفاوت است. شیرخواران با شکاف‌های خفیف، ممکن است

بی‌علامت باشند. به هر حال علائم اصلی آن شامل دیسترس تنفسی، سرفه، خفگی، استریدور، کرپ مکرر، بروز آسپیراسیون و عفونت مکرر دستگاه تنفسی و سیانوز می‌باشد. در صورت عدم تشخیص به موقع شکاف حنجره، می‌تواند منجر به آسپیراسیون مزمن و در نهایت آسیب مزمن بافت ریه شود. بنابراین مدیریت صحیح این عارضه، یعنی استفاده از روش‌های تشخیصی مناسب مانند میکرولازنگوسکوپی، برونکوسکوپی، ویدئوفلوروسکوپی، ارزیابی آندوسکوپی عملکرد بلع و لاواژ پروتئولولیناز حائز اهمیت بالایی است (۴). شدت شکاف حنجره با استفاده از سیستم Benjamin-Inglis دسته‌بندی می‌شود که از چهار دسته بر اساس میزان عمق شکاف تشکیل شده است (۵). شکاف‌های خفیف مانند نوع ۲ و برخی از شکاف‌های نوع ۲ اغلب با اقدامات محافظه‌کارانه مانند تغییر رژیم غذایی، اصلاح سرعت تغذیه، اصلاح پوزیشن هنگام تغذیه، پرداختن به بیماری‌های همراه از جمله رفلاکس معده به مری (GERD Gastroesophageal reflux disorder).

۱- استادیار. گروه کودکان، دانشکده پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی کردستان، سنندج، ایران

۲- مربی، گروه مامایی، دانشکده پرستاری و مامایی، دانشگاه علوم پزشکی کردستان، سنندج، ایران

۳- استادیار، گروه پرستاری، دانشکده پرستاری و مامایی، دانشگاه علوم پزشکی کردستان، سنندج، ایران

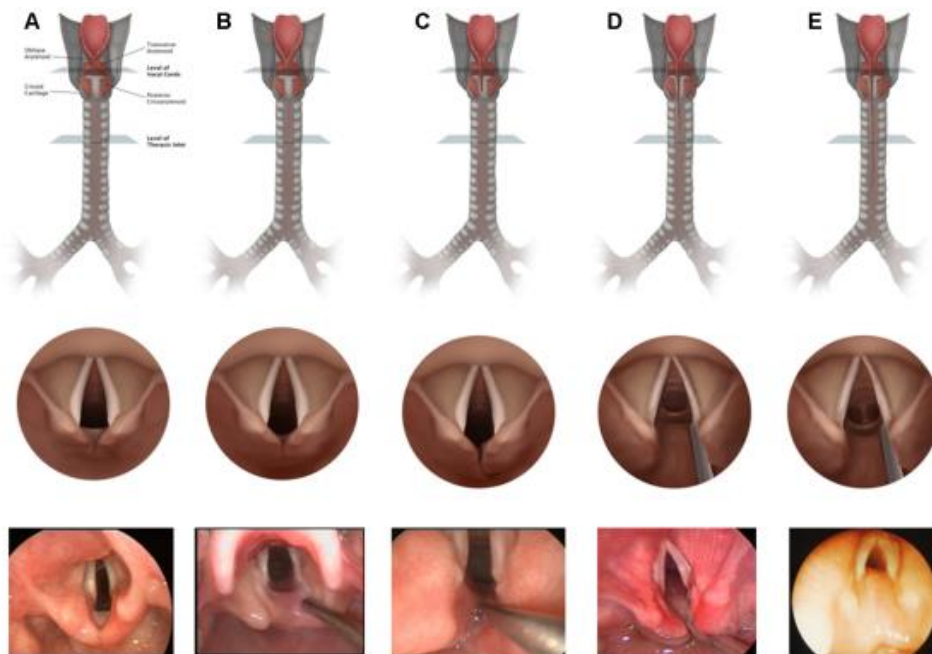
نویسنده مسؤول: ندا شیخ ذکریایی، استادیار، گروه پرستاری، دانشکده پرستاری و مامایی، دانشگاه علوم پزشکی کردستان، سنندج، ایران

Email: n.zakaryaie@gmail.com

گزارش مورد

مادر این شیرخوار خانمی با ۳۱ سال سن و سابقه‌ی سه بار سقط و زایمان اول می‌باشد و سابقه‌ی بیماری خاصی در تاریخچه‌ی پزشکی خود ندارد. در دوران کودکی به جز سابقه‌ی دررفتگی مفصل لگن، سابقه‌ی هیچ نوع بیماری خاص دیگری نداشته است. زایمان وی به صورت سزارین انجام شده است و حاصل زایمان نوزاد دختر با وزن ۳۸۰۰ گرم بوده که در سن بارداری ترم و ۳۸ هفتگی متولد شده است. طبق اظهارات مادر در بدو تولد، نوزاد توانایی مکیدن و شیرخوردن را نداشته است و مرتب دچار کاهش وزن و اتلاف مایعات بدن می‌شد.

التهاب مری و حساسیت غذایی مدیریت می‌شوند (۶) و در صورت شکست این مداخلات غیرتهاجمی، درمان‌های جراحی برای این افراد انجام می‌گیرد. شکاف‌های نوع ۳ و ۴ معمولاً با اقدامات محافظه‌کارانه قابل درمان نیستند و اغلب نیاز به ترمیم جراحی و آندوسکوپی دارند (۲، ۴). در کل انتخاب روش درمانی بستگی به عوامل متعددی مانند سن بیمار، نوع شکاف حنجره و بیماری‌های همراه دارد (۷). در این مقاله یک مورد شکاف حنجره نوع ۲ که در شیرخوار ۲۰ ماهه تشخیص داده شده بود و تحت درمان با دارو و تراکتوستومی قرار گرفت، گزارش می‌گردد (شکل ۱ و ۲).



شکل ۱: تصویر انواع شکاف حنجره (۱۰)

A: تصویر حنجره نرمال، B: شکاف نوع ۲، C: شکاف نوع ۲، D: شکاف نوع ۴



شکل ۲: تصویر شکاف حنجره نوع ۲ در شیرخوار گزارش شده

بیمار و اخذ مجوز از معاونت پژوهشی دانشگاه علوم پزشکی کردستان (کد اخلاق: IR.MUK.REC.1403.028) نوشته شد.

بحث

در بیماران مبتلا به شکاف کام، باید ارزیابی دقیقی از نظر وجود ناهنجاری‌های همراه همانند آترزی مری، فیستول نای-مری، آترزی مقعد، نقایص قلبی، ناهنجاری‌های کلیوی، نقایص ستون فقرات و اندام‌ها انجام شود (۸). اگرچه شکاف کام بیشتر در شیرخواران پسر رخ می‌دهد اما شیوع ناهنجاری‌های همراه در شیرخواران دختر بیشتر است (۴).

روش اساسی تشخیص شکاف حنجره، انجام لارنگوسکوپی است اما نکته‌ی مهم در تشخیص این ناهنجاری نادر، تشخیص آن از سایر تشخیص‌های افتراقی است (۹). به عنوان مثال، شناسایی بیمار مبتلا به شکاف حنجره از میان افرادی که با علائم تنفسی مراجعه می‌کنند بسیار دشوار است. چراکه این علائم می‌تواند با بیماری‌های مختلف دیگری مانند لارنگومالاسی، سندرم GERD، فلج تارهای صوتی و مشکلات تغذیه‌ای (ناشی از هایپوکسی، صدمات زایمانی، عفونت‌های مادرزادی، اعتیاد مادر به مواد مخدر) نیز در ارتباط باشد. به طور کلی باید در کودکان با سابقه‌ی پنومونی مکرر، مشکلات تغذیه‌ای، سرفه، تنگی نفس و استریدور بعد از تغذیه حتماً وجود شکاف حنجره رد شود (۱۰).

در مطالعه‌ی مروری Martha و همکاران، پس از بررسی موارد مشاهده شده‌ی شکاف کام، گزارش دادند که در اکثر موارد، همانند مطالعه‌ی کنونی شکاف کام خود را با مشکلات تغذیه‌ای در کودک نشان می‌دهد. بدین صورت که علامت بالینی غالب در شکاف کام نوع ۲، تنگی نفس و سرفه در حین خوردن و آشامیدن بوده است و در شکاف کام نوع ۲، استریدور، آسپیراسیون و عفونت تنفسی راجعه و در شکاف‌های نوع ۳ و ۴ اختلال در بلع می‌باشد. و هیچ موردی از پنومونی را در ۳۲۷ بیمار مورد بررسی مشاهده نکردند (۴).

روش‌های درمانی بر اساس نوع شکاف حنجره متفاوت است و میزان موفقیت این روش‌ها از ۲۰ تا ۱۰۰ درصد گزارش شده است. شکاف نوع ۲ شامل نقایص سوپراگلوتیک و بین آریتنوئید بدون درگیری تارهای صوتی است و در شکاف نوع ۲ بخش کوچکی از لامینای کریکوئید درگیر می‌شود (۱۰). برای شکاف نوع ۲ معمولاً از روش‌های محافظه‌کارانه و غیرتهاجمی مانند لارنگوپلاستی تزریقی و ترمیم جراحی حین آندوسکوپی استفاده می‌شود. لارنگوپلاستی تزریقی یک روش کمتر تهاجمی است که در اکثر موارد شکاف‌های نوع ۲ را با موفقیت ترمیم می‌کند. در صورت عدم درمان در بار اول، می‌توان لارنگوپلاستی تزریقی را مجدداً تکرار کرد یا از آن به صورت همزمان با ترمیم آندوسکوپی استفاده نمود. ترمیم شکاف حین آندوسکوپی، درمان اولیه برای شکاف حنجره نوع ۲ و ۲ است که یک

به صورتی که تا سن ۴۰ روزگی بعد از تولد، ۶۰۰ گرم وزن خود را از دست می‌دهد. به همین دلیل کاهش وزن، مادر از سن ۲ ماهگی، شروع به استفاده از شیر خشک کرده و همچنین تغذیه‌ی تکمیلی را خودسرانه از سن ۲ ماهگی نیز برای نوزاد شروع می‌کند. در حال حاضر که نوزاد ۲۰ ماهه می‌باشد، شیر خشک هم در کنار غذا مصرف می‌کند. برای نخستین بار در سن ۳ ماهگی با شکایت از شنیدن صدای خس خس در حین تنفس نوزاد، به بیمارستان مراجعه می‌کنند و با تشخیص عفونت ریه در ۳ ماهگی در بیمارستان نوزاد بستری می‌شود و در طی مدت بستری و بعد از ترخیص نیز نوزاد، اصلاً تحمل شیر خوردن نداشته و مرتباً دچار استفراغ می‌شده است و و خس خس و تنگی نفس نوزاد همچنان ادامه داشته است. بار دوم در سن ۸ ماهگی نوزاد، مجدداً با شکایت از سرفه و تنگی نفس به بیمارستان مراجعه می‌کند و باز با تشخیص عفونت ریه، نوزاد بستری و تحت درمان با آنتی‌بیوتیک قرار می‌گیرد اما بعد از ترخیص، طبق اظهارات مادر، حال عمومی نوزاد مناسب نمی‌شود.

بار سوم در تاریخ ۱۴۰۲/۲/۱۸ در بیمارستان بعثت شهر سنندج با شکایت از علائم تنگی نفس و خس خس، نوزاد مجدداً بستری شد و طبق دستور پزشک برونکوسکوپی برای کودک انجام شد و در جواب برونکوسکوپی تشخیص شکاف حنجره نوع ۲ با عوارض مالاسی ژنرالیزه راه هوایی همراه با علایم آسپیراسیون مزمن داده شد و بیمار جهت انجام عمل جراحی به تهران ارجاع گردید.

در مرکز درمانی ارجاع داده شده در تهران نیز مجدداً برونکوسکوپی انجام و تشخیص نهایی شکاف حنجره درجه ۲ گذاشته شد. عمل جراحی تراکستومی برای شیرخوار در آنجا انجام شد و یک هفته شیرخوار در بیمارستان تحت نظر بوده و سپس با حال عمومی مناسب ترخیص شد. سپس جهت اطمینان بیشتر و نظارت دقیق بر حال عمومی شیرخوار، طبق دستور پزشک به مدت دو هفته نیز، در محل سکونت خود شیرخوار، در بیمارستان شهر بوکان، شیرخوار بستری و تحت مراقبت بود. ۲۱ روز بعد از جراحی، جهت معاینه‌ی مجدد و ویزیت پزشک، شیرخوار توسط خانواده‌اش به تهران برده شد و مورد معاینه و پیگیری قرار گرفت که طبق دستور پزشک، به علت پایین بودن سطح SPO2 تراکستومی خارج نشد و تراکستومی سایز کوچکتر برای بیمار تعبیه گردید. یک هفته بعد، بعد از ویزیت مجدد پزشک و اطمینان از نرمال بودن حال عمومی و شرایط شیرخوار، تراکستومی خارج شد. بعد از خروج تراکوستومی به مدت ۱ ماه از اسپری آتروونت و فلوکسیتاید برای شیرخوار استفاده شد و در حال حاضر گلبه علائم بالینی شیرخوار رفع شده و حال وی مساعد می‌باشد. فقط مقدار خیلی کمی علامت خس خس سینه دارد که آن هم در سالیان بعد به علت رشد بافت‌های حنجره از بین خواهد رفت.

لازم به ذکر است که این مطالعه بعد از کسب رضایت آگاهانه از

۱۰ درصد بیماران درمان نشده بودند (۴).

نتیجه گیری

شکاف حنجره، ناهنجاری مادرزادی نادر اما جدی است که معمولاً همراه با ناهنجاری‌های دیگر است. تشخیص شکاف حنجره راحت نیست اما در کودکان و شیرخواران با مشکلات بلع، باید به آن شک کرد. در درمان این بیماران، باید بررسی ناهنجاری‌های همراه حتماً مدنظر قرار گیرد. انتخاب روش درمان به سن بیمار، نوع شکاف و وجود بیماری‌های همراه بستگی دارد. درمان‌های محافظه‌کارانه برای درمان شکاف حنجره نوع ۲ مفید می‌باشد. اگرچه روش‌های درمانی اثربخشی و مزایای متفاوتی دارند اما ترمیم آندوسکوپی و لارنگوپلاستی تریقی روش‌های شایع، مؤثر و بدون عارضه در درمان شکاف حنجره هستند. روش جراحی باز بیشتر برای موارد شدید شکاف و وجود همزمان ناهنجاری‌های دیگر مورد استفاده قرار می‌گیرد.

تشکر و قدردانی

این مقاله حاصل طرح مصوب دانشگاه علوم پزشکی کردستان (۲۹۵۱۲) می‌باشد. از همکاری و مساعدت افرادی که ما را در نوشتن این مقاله همراهی کردند و از خانواده‌ی بیمار محترم که با رضایت آنها این مقاله نوشته شد و همچنین مسئولین و همکاران بیمارستان بعثت شهر سنندج تشکر و قدردانی می‌شود.

روش قابل تحمل و قابل اعتماد می‌باشد که میزان عوارض آن نسبت به ترمیم به روش باز بسیار کمتر است (۱۱).

Isaac و همکاران، گزارش دادند که از ۵۵ بیماری که تحت لارنگوسکوپی تریقی قرار گرفتند، ۱۹ بیمار نیاز به ترمیم آندوسکوپی پیدا کردند که ۱۷ نفر آن‌ها ترمیم موفقیت‌آمیزی داشتند (۷). شکاف نوع ۳، شامل درگیری کامل لامینای کریکوتید است و در شکاف نوع ۴ این درگیری به نای هم می‌رسد. بر اساس نتایج مطالعه‌ی مروری Martha و همکاران، ۸۷ درصد از بیماران مبتلا به شکاف نوع ۳ به روش ترمیم آندوسکوپی و ۶۶ درصد از بیماران مبتلا به شکاف نوع ۴ به روش عمل جراحی باز درمان شده‌اند. روش جراحی باز معمولاً برای شکاف‌های شدیدتر کاربرد دارد چراکه دید بهتری نسبت به ترمیم آندوسکوپی دارد اما یک روش تهاجمی تر است که دوره‌ی نقاهت طولانی‌تر و عوارض بیشتری به دنبال دارد (۴).

Cohen و همکاران گزارش دادند که علائم شکاف نوع ۲ در عرض ۳/۳ ماه بعد از انجام لارنگوپلاستی تریقی بهبود یافته است (۱۲). در حالیکه Alshammari و Aljomah در مطالعه‌ی خود گزارش دادند که در عرض ۶ هفته بعد از ترمیم آندوسکوپی، شکاف‌های نوع ۲ و ۲ در درمان شدند (۱۳).

در مطالعه‌ی مروری Martha و همکاران، نیز که نتایج جراحی ۶۷۷ مورد شکاف کام مورد بررسی قرار دادند، مشاهده کردند که در عرض ۶ هفته بعد از جراحی، ۹۰ درصد بیماران بهبود یافته بودند و

References

- Osborn AJ, De Alarcon A, Tabangin ME, Miller CK, Cotton RT, Rutter MJ. Swallowing function after laryngeal cleft repair: more than just fixing the cleft. *Laryngoscope* 2014; 124(8): 1965–9.
- Rossi MS, Bernardis Buhler KE, Ventura GAB, Otoch JP, Olivani Limongi SC. Laryngeal cleft type I in neonate: case report. *Codas* 2014; 26(5): 421–4.
- Strychowsky JE, Rahbar R. Laryngotracheoesophageal clefts. *Semin Pediatr Surg* 2016; 25(3): 128–31.
- Martha VV, Vontela S, Calder AN, Martha RR, Sataloff RT. Laryngeal cleft: A literature review *Am J Otolaryngol* 2021; 42(6): 103072.
- Benjamin B, Inglis A. Minor congenital laryngeal clefts: diagnosis and classification. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1989; 98(6): 417–20.
- Bowe SN, Hartnick CJ. Management of type I and type II laryngeal clefts: controversies and evidence. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg* 2017; 25(6): 506–13.
- Isaac A, Svystun O, Johannsen W, El-Hakim H. Injection augmentation and endoscopic repair of type I laryngeal clefts: development of a management algorithm. *J Otolaryngol Head Neck Surg* 2020; 49(1): 49.
- Jorgensen C, Trivedi A, Cheng A, De Lima J, Walker K. Laryngeal cleft—case series from a surgical neonatal intensive care unit. *Aust J Otolaryngol* 2018; 1(2): 10.
- Mangat HS, El-Hakim H. Injection augmentation of type I laryngeal clefts. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2012; 146(5): 764–8.
- Johnston DR, Watters K, Ferrari LR, Rahbar R. Laryngeal cleft: evaluation and management. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2014; 78(6): 905–11.
- Day KE, Smith NJ, Kulbersh BD. Early surgical intervention in type I laryngeal cleft. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2016; 90: 236–40.
- Cohen MS, Zhuang L, Simons JP, Chi DH, Maguire RC, Mehta DK. Injection laryngoplasty for type 1 laryngeal cleft in children. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2011; 144(5): 789–93.
- Aljomah D, Alshammari J. Laser assisted double-layer endoscopic repair of laryngeal clefts: out experience in 11 cases. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 2017; 69(3): 307–12.
- Martha VV, Vontela S, Calder AN, Martha RR, Sataloff RT. Laryngeal cleft: a literature review. *Am J Otolaryngol* 2021; 42(6): 103072.
- Timashpolsky A, Schild SD, Ballard DP, Leventer SP, Rosenfeld RM, Plum AW. Management of type 1 laryngeal clefts: a systematic review and meta-analysis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2021; 164(3): 489–500.

Laryngeal Cleft Type 2 in a 20-Month-Old Infant: a Case Report

Shilan Mohammadi¹, Seyedeh Soma Zakariaee², Neda Sheikh Zakaryae³

Case Report

Abstract

Background: Cleft of the larynx is a congenital abnormality caused by an abnormal connection between the esophagus, trachea, and larynx. This disease is rare as it can be a principal cause of respiratory and feeding morbidity in the infant and pediatric. The treatment method for laryngeal cleft is based on the different clinical conditions of the patient and includes drug treatment and surgical restorative treatments. In this article, a case of laryngeal cleft type 2 in an infant girl 20 months is reported.

Case presentation: A 20-month-old female infant was brought to the hospital complaining of shortness of breath and wheezing. The infant has been admitted to the hospital 3 times due to swallowing problems, weight loss, and wheezing with the diagnosis of lung infection. After performing the diagnostic procedures, grade 2 laryngeal cleft was diagnosed, and the infant was a candidate for surgery and tracheostomy. After the surgery, taking medicine for one month, and leaving the tracheostomy, the general condition of the infant was good.

Conclusion: It is necessary to perform surgery and tracheostomy in the laryngeal gap to solve the patient's breathing problems.

Keywords: Laryngeal cleft; infant; Benjamin-Inglis system

Citation: Mohammadi Sh, Zakariaee SS, Sheikh Zakaryae N. **Laryngeal Cleft Type 2 in a 20-Month-Old Infant: a Case Report.** J Isfahan Med Sch 2024; 42(788): 936-40.

1- Assistant Professor, Department of Pediatrics, School of Medicine, Kurdistan University of Medical Sciences, Sanandaj, Iran

2- Lecture, Department of Midwifery, School of Nursing and Midwifery, Kurdistan University of Medical Sciences, Sanandaj, Iran

3- Assistant Professor, Department of Nursing, School of Nursing and Midwifery, Kurdistan University of Medical Sciences, Sanandaj, Iran

Corresponding Author: Neda Sheikh Zakaryae, Assistant Professor, Department of Nursing, School of Nursing and Midwifery, Kurdistan University of Medical Sciences, Sanandaj, Iran; Email: n.zakaryaie@gmail.com